



TITLE:

腹腔鏡下に切除した後腹膜血管平滑筋腫の1例

AUTHOR(S):

坂田, 綾子; 槇山, 和秀; 野口, 剛; 佐野, 太; 中井川, 昇;
矢尾, 正祐; 中山, 崇; 山中, 正二; 窪田, 吉信

CITATION:

坂田, 綾子 ...[et al]. 腹腔鏡下に切除した後腹膜血管平滑筋腫の1例. 泌尿器科紀要 2012, 58(2): 75-78

ISSUE DATE:

2012-02

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/154631>

RIGHT:

許諾条件により本文は2013-03-01に公開

腹腔鏡下に切除した後腹膜血管平滑筋腫の1例

坂田 綾子¹, 槇山 和秀¹, 野口 剛¹佐野 太¹, 中井川 昇¹, 矢尾 正祐¹中山 崇², 山中 正二², 窪田 吉信¹¹横浜市立大学医学部泌尿器病態学, ²横浜市立大学医学部病理学A CASE OF RETROPERITONEAL ANGIOLEIOMYOMA
RESECTED BY LAPAROSCOPYRyoko SAKATA¹, Kazuhide MAKIYAMA¹, Go NOGUCHI¹,Futoshi SANO¹, Noboru NAKAIGAWA¹, Masahiro YAO¹,Takashi NAKAYAMA², Seiji YAMANAKA² and Yoshinobu KUBOTA¹¹The Department of Urology, Yokohama City University Graduate School of Medicine²The Department of Pathology, Yokohama City University Graduate School of Medicine

A retroperitoneal angioleiomyoma was incidentally detected in a 56-year-old woman during an examination of cardiovascular disease, and referred to the department of urology. Computed tomography (CT) showed a solid tumor approximately 3 cm in diameter, enhanced heterogeneously adjacent to the right adrenal and renal vein on magnetic resonance imaging the tumor showed a low intensity in the T1-weighted image and high intensity in T2-weighted image. These radiographic findings suggested a retroperitoneal tumor such as paraganglioma, angioma. Furthermore, because she was a carrier of Human Adult T Cell Leukemia Virus-I (HTLV-I) this tumor was suspected to have relevance to malignant lymphoma. We performed laparoscopic surgical excision of the tumor. Pathological diagnosis was an angioleiomyoma. Angioleiomyoma is a rare type of leiomyoma originating from smooth muscle and containing thick-walled vessels. Only a few cases of retroperitoneal angioleiomyoma have been reported.

(Hinyokika Kiyo 58 : 75-78, 2012)

Key words : Angioleiomyoma, Retroperitoneal tumor, Laparoscopic surgery

緒 言

原発性後腹膜腫瘍は比較的稀な疾患で、悪性腫瘍が多いとされる^{1,2)}。その組織型は多岐にわたるが、平滑筋腫の頻度は低い³⁾。今回、われわれは腹腔鏡下に切除した後腹膜血管平滑筋腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：56歳、女性

主訴：偶発的後腹膜腫瘍

既往歴：急性A型肝炎、両下肢静脈瘤手術、HTLV-I キャリア

内服薬：なし

現病歴：2010年7月下旬、労作時息切れのため循環器内科受診した。循環器疾患は否定されたが、精査中に下大静脈傍に充実性腫瘍を指摘され同年9月に当科紹介受診となった。

現症：身長149 cm, 体重58 kg, 血圧120/70 mmHg, 心拍数66回/分

腹部：平坦&軟、圧痛認めず

血液検査：血算はWBC 5,600/ul (Neut 63%, Lymph 26%), RBC 440万/ul, Hb 13.1 g/dl, Plt 23.5万/ulと正常範囲内であり生化学検査特に異常所見を認めなかった。腫瘍マーカーはIL-2R 721 U/ml (基準値145~519 U/ml)と軽度高値を示した。副腎ホルモン検査でコルチゾール, 11-OHCS, ACTH, DHEA-S,

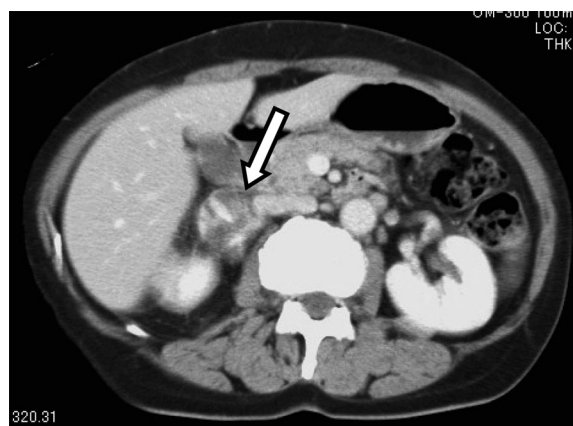


Fig. 1. Contrast enhanced CT showed a solid mass with enhanced regular walls in the right retroperitoneal space.

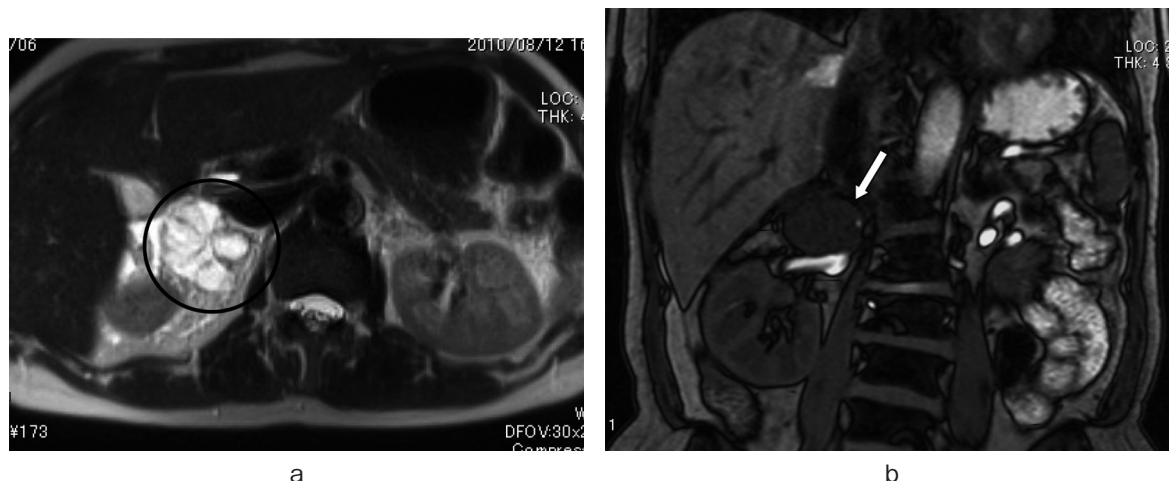


Fig. 2. Magnetic resonance imaging revealed a tumor. The major part of the tumor was hyperintense in T2-weighted image and hypointense in T1-weighted image (a: T2-weighted transverse section, b: T1-weighted coronal section).

アルドステロン，血中カテコラミン 3 分画すべて正常範囲内であった。

画像所見：CT で右副腎と腎静脈の間に辺縁明瞭な径 30 mm 大の腫瘍を認めた。単純 CT では全体的に濃度が低めであり一見嚢胞様であるが辺縁優位に強い増強効果を認めた (Fig. 1)。MRI で腫瘍は T1 強調像で低信号，T2 強調像で高信号を示し，内部には隔壁があり数個の嚢胞成分が一塊となった所見を示した (Fig. 2)。副腎髓質 MIBG では腫瘍に一致する部位に有意な MIBG の集積は認めなかった。

また HTLV-1 陽性であったため後腹膜腫瘍と成人 T 細胞白血病・リンパ腫 (adult T-cell leukemia: ATL) の関連性について血液内科にコンサルトしたところ，HTLV-1 による悪性リンパ腫の可能性は否定できず，確定診断のために後腹膜腫瘍の生検が必要となった。

以上より，傍神経節腫，血管腫，悪性リンパ腫などの後腹膜腫瘍を疑って腹腔鏡下腫瘍切除術を施行した。

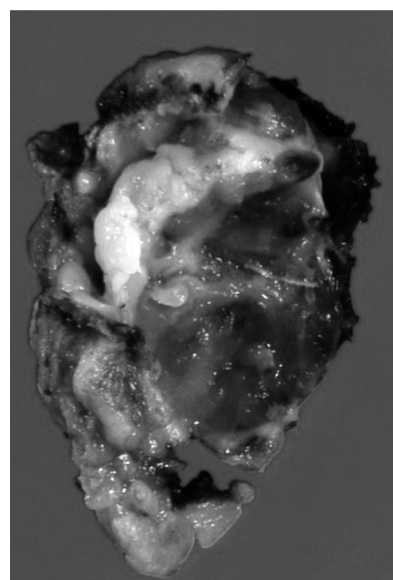


Fig. 3. The resected specimen. The cut surface of the specimen was smooth.

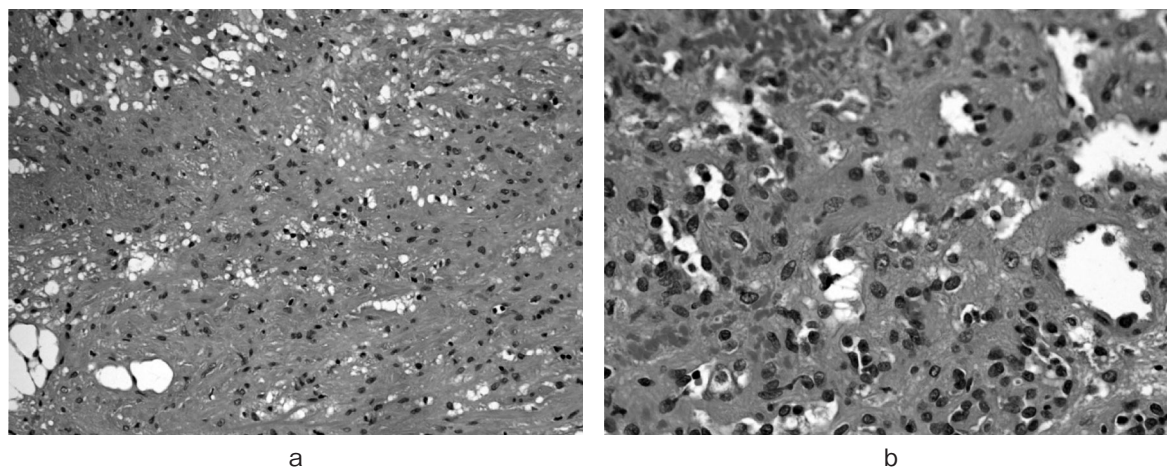


Fig. 4. Microscopically, the tumor was formed of smooth muscle tissue and thick-walled vessels. Tumor cells expressed SMA, and most of the vessels were stained with CD34 antibody (a: HE stain (×20), b: SMA stain (×40)).

手術所見: 全身麻酔下に体位は右側臥位とし、オープンラパロトミーで右肋骨弓下に 12 mm トロッカーを設置して気腹し、12 mm トロッカー 1 本、5 mm トロッカー 2 本を肋骨弓下に沿って追加した。手術時間は 2 時間 9 分、出血量は 50 ml 程度であった。腫瘍は腎上極、下大静脈、副腎と接していたが剥離可能であった。下副腎静脈系および中副腎静脈系は発達しており腫瘍内部に入っていた。副腎中心静脈は正常副腎に入っており、正常副腎と共に温存した。

摘出標本: 腫瘍は重量 6.9 g、大きさは 25×20×30 mm 大の表面平滑な灰褐色の充実性腫瘍であった (Fig. 3)。

病理組織所見: 紡錘形の核と線維性の細胞質を持つ細胞が束状に増殖し、平滑筋への分化を疑う部分、および血管内皮様の小型類円形細胞に裏打ちされた小間隙から成っていた。免疫組織染色で α SMA 陽性、血管内皮様の部分に CD34 陽性であり、HMB45 陰性、Melan A 陰性、CK-AE1/AE3 陰性、Bcl-2 陰性であった。MIB-I index は部分的には最大でも 5 % 程度であったがほとんどの部分で陰性であった。平滑筋と血管への分化を持ち血管平滑筋腫の診断であった。リンパ腫を支持する所見は認めず、HTLV-1 サザンブロットは陰性であった (Fig. 4)。

術後経過: 術後経過は良好で術後 7 日目に退院となった。術後 6 カ月間、再発なく外来で経過観察を行っている。

考 察

後腹膜腫瘍は Pack¹⁾ らの報告によると全腫瘍の 0.2% を占めるにすぎない比較的稀な疾患で悪性の頻度が高いとされる。特に欧米の報告では 80% 前後が悪性であったとする報告が多く^{4,5)}、脂肪肉腫、悪性リンパ腫、平滑筋肉腫の順になっている²⁾。一方、本邦報告例における悪性頻度は、天野らの 1,104 例中 33.6%⁶⁾、朝長らの 2,275 例中 55%⁷⁾ と比較的低いようである。良性腫瘍のなかでは奇形種、囊胞神経性腫瘍、脂肪腫などの報告が比較的多く、平滑筋腫は後腹膜腫瘍のうち 1～2 % と頻度は低い^{8,9)}。

後腹膜腫瘍は、大半の症例が腫瘍触知や腹部不快感などの症状を契機に発見されたり、検診時に偶然発見されることが多いが、後腹膜は silent space といわれ、症状発現時にはすでに腫瘍が増大していることが多い¹⁰⁾。

後腹膜腫瘍の診断について脂肪肉腫や神経鞘腫の MD-CT や MRI における診断上の特徴も報告されているが、術前の確定診断は困難で、画像診断は質的診断よりも腫瘍の進展や周囲臓器との関係を明らかにするために有用¹¹⁾と考えられる。良悪性の鑑別に関して、Nagashima ら¹²⁾ は、①腫瘍最大径 5.5 cm を超え

ること、②自覚症状のあること、③石灰化のないこと、④辺縁不整像を認めること、⑤内部壊死像があることを各 1 点として点数化した retroperitoneal tumor score を提唱し、合計点が 1 点以下で悪性の可能性は 0 %、2 点で 25 %、3 点で 50 %、4 点で 60 %、5 点で 100 % と報告した。今回の症例に retroperitoneal tumor score を当てはめると、③石灰化のないことのみ当てはまり score は 1 点で悪性の可能性は 0 % となった。

また Tambo ら¹³⁾ は悪性所見として、①有症状であること、②腫瘍辺縁が不整であること、③ dynamic MRI で早期に濃染されることを挙げており、サイズ、壊死性変化、囊胞性変化や石灰化の有無などは有意差がないと報告した。今回の症例は無症状で、サイズは小さく、辺縁が整であり良性腫瘍の可能性が高いと考えたが、画像診断のみで確定困難であり、さらに HTLV 陽性より悪性リンパ腫も疑われたため腫瘍切除術を施行した。悪性リンパ腫は後腹膜腫瘍の重要な鑑別診断の 1 つである。単純 CT で筋肉と同程度の吸収値で、造影により均一かつ軽度の濃染を示し MRI では T1 強調像で筋肉と等信号か軽度の低信号、T2 強調像で筋肉より軽度高い信号強度を示すが確定診断のために生検が必要となる場合が多い¹⁴⁾。

後腹膜腫瘍の治療としては、外科的切除が第一選択と考えられる。術後の病理診断で悪性所見があったとしても、悪性後腹膜腫瘍は完全切除された場合には、不完全切除と比較して有意に予後が良好といわれている¹⁵⁾ ので、いずれにしても腫瘍の完全切除が必要である。後腹膜腫瘍の腹腔鏡下手術の適応について、一定の見解は得られていない。本症例のように小さな腫瘍であれば腹腔鏡によるアプローチにより腫瘍摘出を行うことで低侵襲に診断的治療を行うことが可能であると考えられる。

平滑筋腫は平滑筋由来の良性腫瘍であり、平滑筋の存在する部位ならばどこでも発生しうる。平滑筋腫は、1) 女性生殖器 (子宮)、消化管などに発生する leiomyoma (solid)、2) 血管壁の平滑筋より発生する血管平滑筋腫 vascular leiomyoma (angiomyoma)、3) 立毛筋や皮膚に発生する上皮様平滑筋腫 epithelioid leiomyoma (leiomyoblastoma) の 3 タイプに分類され¹⁶⁾、子宮からの発生が大部分を占めている。現在までの後腹膜平滑筋腫の本邦報告例は調べうる限り 120 例程度であるが、そのうち血管平滑筋腫の症例報告は 6 例、類上皮様血管平滑筋腫は 4 例である。血管平滑筋腫は中年女性に多くみられ、四肢、特に下肢に好発する¹⁷⁾。頭頸部や顎下腺、子宮、後腹膜に発生するのは稀である¹⁸⁻²⁰⁾。後腹膜に発生する血管平滑筋腫は非常に稀であるため画像所見についてはほとんど不明である¹⁷⁾。子宮の血管平滑筋腫の画像所見については、囊胞状変化を示す部位がみられること、CT で充

実性腫瘤の中に蛇行した血管構造のようなものが造影されるなどの特徴が報告されている^{20,21)}。今回の症例では腫瘤内部には隔壁があり嚢胞成分が一塊となった所見を示し、また辺縁優位に強い増強効果を認めるなど子宮の血管平滑筋腫で報告されている画像所見と似た所見を示していた。

血管平滑筋腫は組織学的には類円ないし楕円形で丸みを帯びた、異型性のない核および好酸性の胞体を有する紡錘形の細胞が束状にあるいは interacting pattern を呈する部位と血管内皮様の小型類円形細胞に裏打ちされた小間隙から成っており、通常細胞分裂像は見られない^{9,19)}。後腹膜平滑筋腫の良悪性の判断は慎重に行う必要があり、従来から有糸分裂像の頻度と腫瘍径による判断基準が示されてきた。Ranchod²²⁾らは高倍率で10視野に5個以上の細胞分裂があれば悪性で、腫瘍径が10 cm以上あれば悪性の可能性が高いとしており、Shmooklerら²³⁾は10視野に1個以上の細胞分裂があるか腫瘍径が7.5 cm以上あれば転移をおこす可能性があるとしている。本症例は腫瘍が小さく細胞分裂像もほとんどみられず悪性の可能性はきわめて低いと考えられる。

結 語

腹腔鏡下に摘除することができた稀な後腹膜発生の血管平滑筋腫を経験したので文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Pack GT and Tabah EJ: Collective review, primary retroperitoneal tumor, a study of 120 cases. *Surg Gynecol Obstet* **99**: 209-231, 313-341, 1954
- 2) 濱田義浩, 中山吉福, 岩崎 宏: 臍・胆道周囲の腫瘍性病変の病理. *消画像* **8**: 667-672, 2006
- 3) 柿崎 弘, 山口寿功, 鈴木 仁, ほか: 後腹膜平滑筋腫の1例および本邦報告例の検討. *日泌尿会誌* **80**: 1657-1660, 1989
- 4) Armstrong JR and Cohn I Jr: Primary malignant retroperitoneal tumors. *Am J Surg* **110**: 937-943, 1965
- 5) 山形敬一, 大内栄悦, 川村 武: 消化器病1病1例(8) 後腹膜腫瘍. *日臨* **35**: 89-98, 1977
- 6) 天野直道, 田中哲軒, 大森弘之, ほか: 後腹膜類皮嚢腫の1例—後腹膜腫瘍本邦報告1,104例の統計的観察—. *西日泌尿* **37**: 734-741, 1975
- 7) 朝長 毅, 奥山和明, 長尾孝一, ほか: 多彩な組織像を有する後腹膜脂肪腫の1治験例. *癌の臨* **32**: 927-932, 1986
- 8) Braasch JW and Mon AB: Primary retroperitoneal tumors. *Surg Clin North Am* **47**: 663-678, 1967
- 9) 小川東明, 水澤清昭, 山根成之, ほか: 後腹膜平滑筋腫の1例. *外科* **65**: 982-986, 2003
- 10) 木内 誠, 柴田 近, 鹿郷昌之, ほか: 腹腔鏡下に切除した後腹膜平滑筋腫の1例. *日胸外会誌* **15**: 321-326, 2010
- 11) 伊東 均, 永田順子, 高山雅臣, ほか: 後腹膜腫瘍における術前各種画像診断有用性の比較検討 Helical CT を中心とした術前画像診断. *産婦治療* **78**: 247-252, 1999
- 12) Nakashima J, Ueno M, Murai M, et al.: Differential diagnosis of primary benign and malignant retroperitoneal tumors. *Int J Urol* **4**: 441-446, 1997
- 13) Tambo M, Fujimoto M, Miyake M, et al.: Clinico-pathological review of 46 primary retroperitoneal tumors. *Int J Urol* **14**: 785-788, 2007
- 14) Stark DD and Bradley WB Jr: Primary retroperitoneal tumor. In *Magnetic Resonance Imaging*. Mosby-Year Book, ST. Louis 1992, 1876-1877
- 15) Xu YH, Guo KJ, Guo RX, et al.: Surgical management of 143 patients with adult primary retroperitoneal tumor. *World J Gastroentero* **13**: 2619-2621, 2007
- 16) Weiss SW and Goldbulm JR: Benign tumors of smooth muscle. In: *Enzinger and Weiss' soft tissue tumors*. Edited by Weiss SW and Goldbulm JR. 4th ed, pp 699-700, St Louis, Mosby, 2001
- 17) Özkavukcu E, Aygün S, Erden A, et al.: Pelvic retroperitoneal angioleiomyoma mimicking a uterine mass. *Diagn Interv Radio* **15**: 262-265, 2009
- 18) Wang CP, Chang YL, Sheen TS, et al.: Vascular leiomyoma of the head and neck. *Laryngoscope* **114**: 661-665, 2004
- 19) Ide F, Mishima K, Saito I, et al.: Angiomyoma in the submandibular gland: a rare location for ubiquitous tumour. *J Laryngol Otol* **117**: 1001-1002, 2003
- 20) Culhaci N, Ozkara E, Yuksel H, et al.: Spontaneously ruptured uterine angioleiomyoma. *Pathol Oncol Res* **12**: 50-51, 2006
- 21) Hsieh CH, Lui CC, Huang SC, et al.: Multiple uterine angioleiomyomas in a woman presenting with severe menorrhagia. *Gynecol Oncol* **90**: 348-352, 2003
- 22) Ranchod R and Kempson RL: Smooth muscle tumors of the gastrointestinal tract and retroperitoneum. *Cancer* **39**: 255-262, 1977
- 23) Shmookler BM and Lauer DH: Retroperitoneal leiomyosarcoma: a clinicopathologic analysis of 36 cases. *Am J Surg Pathol* **7**: 269-280, 1983

(Received on August 26, 2011)
(Accepted on October 28, 2011)